

症例報告

睡眠時無呼吸を来した
巨大な舌下-オトガイ下型類表皮嚢胞の1例¹⁾博慈会記念総合病院歯科口腔外科²⁾鶴見大学歯学部口腔顎顔面外科学教室³⁾昭和大学歯学部口腔外科学講座顎顔面口腔外科学部門⁴⁾昭和大学歯学部スペシャルニーズ口腔医学講座地域連携歯科学部門⁵⁾仁厚会病院歯科口腔外科⁶⁾昭和大学歯学部口腔病態診断科学講座口腔病理学部門伊藤 迪子^{1,2)} 岩瀬 正泰^{*1,2,3)} 片山 波音^{1,4)}西島 啓晃⁵⁾ 近藤 元^{3,5)} 河野 葉子⁶⁾

抄録：今回われわれは、舌下-オトガイ下に発生した巨大な類表皮嚢胞を経験したので、その概要を報告する。症例は55歳、男性、オトガイ下の腫脹を主訴に当科を受診した。オトガイ下部に無痛性、弾性軟のびまん性腫脹を認め、家族から睡眠時の無呼吸状態を指摘されていた。MRI検査ではT1強調像で低信号、T2強調像で高信号の50×30×50mmの嚢胞性病変本体をオトガイ下に確認し、病変の一部は舌骨上筋から口底方向に伸展を示していた。術前の睡眠ポリグラフ検査を行ったところ無呼吸/低呼吸指数（apnea-hypopnea index, 以下AHI）が22.6と中等度の睡眠時無呼吸症候群と診断された。臨床診断で類皮あるいは類表皮嚢胞を疑い、全身麻酔下、口外法で嚢胞摘出術を行った。病理組織検査では顆粒層を有する角化重層扁平上皮で裏層された嚢胞形成を示し、腔内に層状の角化物を伴うも嚢胞壁に皮膚付属器を認めず、類表皮嚢胞と診断した。術後のAHIは9.3と著明な改善がみられた。

キーワード：類表皮嚢胞，睡眠時無呼吸症候群，MRI検査

類皮嚢胞および類表皮嚢胞の成因は、胎生期に外胚葉組織が深部に嵌入¹⁾することや、外傷、炎症あるいは手術などによる上皮組織の迷入²⁾とされているが、不明な点も多い。好発部位は全身的には肛門や卵巣であるが、顎顔面領域では口底やオトガイ部に発生することが多い³⁾。一般的に、類皮嚢胞および類表皮嚢胞は無症状に発育することが多いが、増大すると構音、摂食嚥下や呼吸に障害を及ぼすことがある⁴⁻⁹⁾。今回われわれは、睡眠時無呼吸を来した舌下-オトガイ下に発生した巨大な類表皮嚢胞を経験したので、その概要に文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：55歳、男性。

*責任著者

初診：2012年6月。

主訴：オトガイ部の無痛性腫脹。

現病歴：2011年11月にオトガイ部の腫脹を自覚するも、無痛性のため放置していた。その後、同部の腫脹が徐々に増大傾向を示したので、精査目的で2012年6月に当科を受診した。受診直近時、家族から睡眠時の無呼吸を指摘されていた。

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現症：

全身所見：体格中等度、栄養状態は良好であった。

口腔外所見：オトガイ下部にびまん性、弾性軟の腫脹を認めた（写真1）。

口腔内所見：口底に軽度の腫脹を認めるも、舌運動や顎下腺唾液の流出は正常であった。



写真1 初診時の顔貌写真
オトガイ下部の腫脹を認めた。



写真2 超音波写真
辺縁やや不整、被膜構造を有する境界明瞭な類円形腫瘤を示した。

検査所見：2012年6月の超音波検査では、辺縁やや不整、被膜構造を有する境界明瞭な類円形腫瘤（55 × 41 mm）で内容物の存在が示唆された（写真2）。2012年7月のMRI検査ではT1強調像で低信号、T2強調像で高信号を呈する腫瘤（50 × 35 × 50 mm）を認め、一部に多発な点状の低信号を示した（写真3A, B）。腫瘤の一部は、顎舌骨筋を越えて口底側に進展していた（写真3C）。なお、血液検査では特記所見はなかった。終夜睡眠時ポリグラフ検査（polysomnography, 以下PSG）では無呼吸／低呼吸指数（apnea-hypopnea index, 以下AHI）が22.6を示し、中等度の睡眠時無呼吸症候群（obstructive sleep apnea syndrome, 以下OSAS）と診断した。MRI所見で舌が腫瘤によって後方へ圧排されていた（写真3D）。

臨床診断：類表皮嚢胞あるいは類皮嚢胞。

処置および経過：2012年7月、腫脹部を穿刺したところ粘稠な内容物を吸引した。病理組織所見では軽度の好中球浸潤を伴う層状の角質物を認めた。2012年9月、全身麻酔下でオトガイ下部に約6 cmの皮膚切開を加え、口外法で嚢胞摘出術を施行した（写真4）。病変は周囲組織との癒着も少なく、比較的容易に剥離、摘出できた。病変本体の右側は、MRIで示されたように顎舌骨筋層から上方に進展していた。術後は合併症もなく、オトガイ下部の腫脹は消失した。さらに、術後のAHIは9.3と改善がみられた。術後2年経過した現在まで再発の徴候はなく、経過は良好である。

摘出物所見：摘出物は63 × 45 × 38 mm、表面平滑、帯黄色、弾性軟で瓢箪状を呈していた（写真5）。

病理組織学的所見：角化重層扁平上皮で覆われた嚢胞性病変で、腔内には層状の角化物がみられた。嚢胞壁に皮膚付属器はみられなかった（写真6A, B）。

病理組織診断：類表皮嚢胞

考 察

類皮嚢胞および類表皮嚢胞は身体各部に発生するが、肛門や卵巣での発生頻度が高い³⁾。口底での類皮嚢胞および類表皮嚢胞の発生は身体全体では1.6%と比較的まれである³⁾。発生機序は胎生期における外胚葉の嵌入¹⁾、あるいは後天的に外傷や炎症などによる上皮嵌入²⁾によって発生すると考えられている。本症例は、約半年間で急激な腫瘤増大や発症年齢が高いことから後天的に何らかの誘因によって、上皮迷入が生じた可能性が示唆された。

症状は無痛性腫脹が多く、発育が緩慢なため無自覚の経過をたどるが、嚢胞が増大すると発音障害、嚥下障害⁴⁻⁶⁾や呼吸困難⁷⁻⁹⁾などを起こすことがある。これらの機能障害は舌下型に多く、舌の形態や位置異常をもたらすためと述べている⁹⁾。本症例でも腫瘤の一部は舌骨上筋より上方に存在していたこともあり、舌を後上方へ圧排、咽頭腔の狭窄が示唆された。

類表皮嚢胞の画像上の特徴として超音波検査では、周囲との境界明瞭、辺縁整な腫瘤を示す¹⁰⁾。

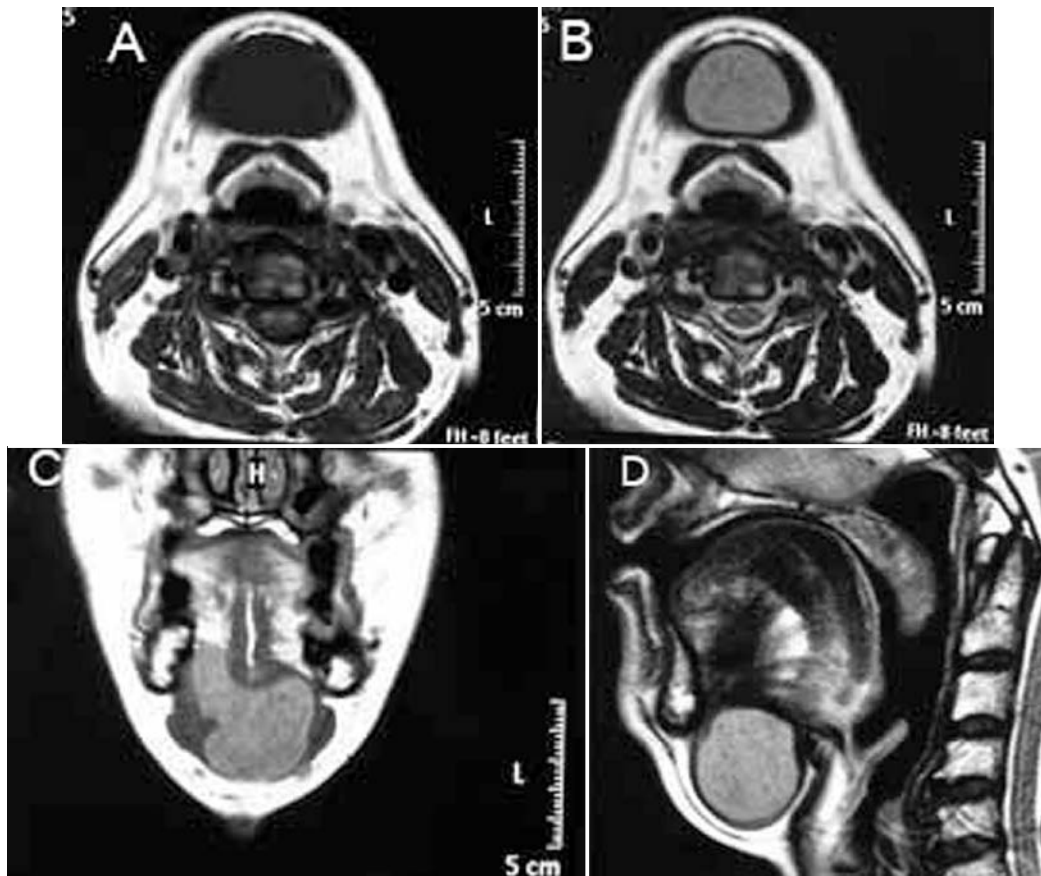


写真 3 MRI

- A: T1 強調像 (水平断) 境界明瞭な低信号域を示した。
 B: T2 強調像 (水平断) 境界明瞭な高信号域の中に一部に多発な点状の低信号域を示した。
 C: T2 強調像 (前頭断) 舌下およびオトガイ下部に瓢箪形の高信号域を示した。
 D: T2 強調像 (矢状断) 舌の後上方への圧排を示した。

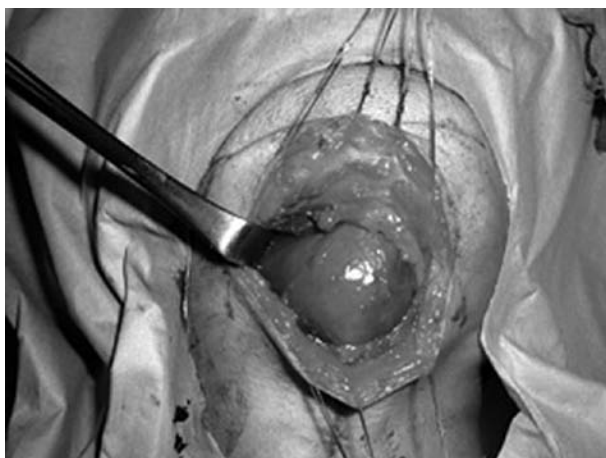


写真 4 術中写真
口外法で嚢胞摘出術を行った。

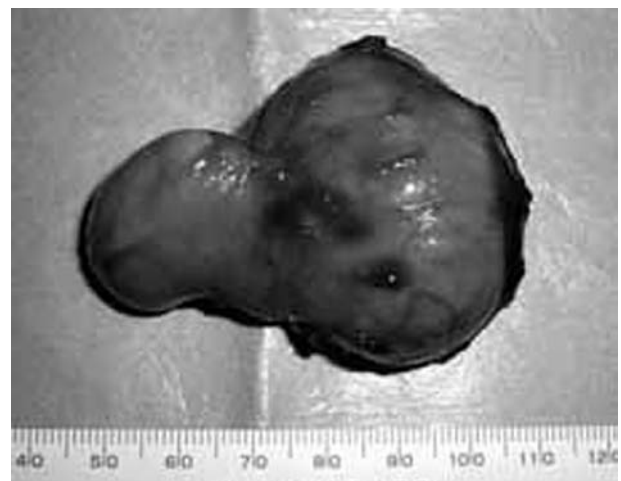


写真 5 摘出標本写真
病変標本は $63 \times 45 \times 38\text{mm}$ 、表面平滑、帯黄色、弾性軟で瓢箪状を呈した。

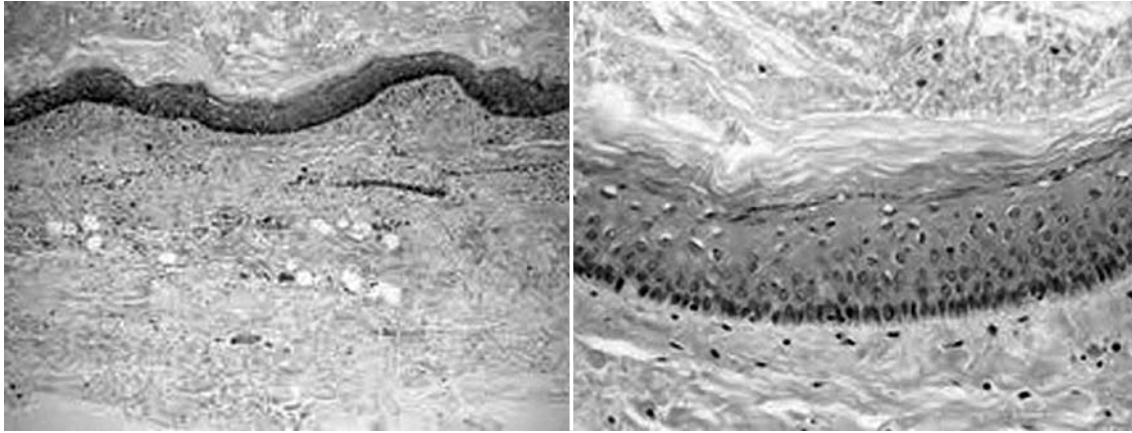


写真 6 病理組織像 (H-E 染色, A: $\times 10$ B: $\times 40$)

扁平上皮で裏層された嚢胞構造を形成し、内腔に層状の角化物を認め、嚢胞壁には皮膚付属器を認めなかった。

CT では、脂肪組織と同様に低吸収で被膜を有し、腫瘍全周に造影効果を認めることが多い^{10, 11)}。MRI では、液体と等信号を呈し T1 強調画像で低信号、T2 強調画像で高信号を示すことが多いと報告されている^{7, 10-13)}。本症例の超音波および MRI 検査結果は、類表皮嚢胞における画像の特徴所見と一致していた。諸家の報告によると類表皮嚢胞の画像診断では MRI が最も有用であると述べている^{6, 12, 13)}。

組織学的分類は Meyer¹⁴⁾ の分類が一般的に用いられている。すなわち、重層扁平上皮で覆われた嚢胞壁に皮膚付属器 (毛髪、毛包、脂腺など) を有する類表皮嚢胞、皮膚付属器を有さない類表皮嚢胞と皮膚付属器、結合組織 (骨、筋肉、血管など) および呼吸器あるいは消化器組織を有する奇形腫様嚢胞に分類している。本症例は、病理組織学的所見から皮膚付属器を有さない類表皮嚢胞と診断した。

一般的には頭頸部領域では類表皮嚢胞の発生頻度は、類表皮嚢胞と比較して高いと報告¹⁵⁻¹⁹⁾されているが、口底あるいはオトガイ部での頻度は、20 例中 11 例¹⁵⁾、10 例中 5 例¹⁶⁾、14 例中 10 例¹⁷⁾、6 例中 2 例¹⁸⁾、45 例中 16 例¹⁹⁾ が類表皮嚢胞と報告者により異なる。嚢胞の大きさは 3 cm 以下のものが多く^{15, 16, 18)}、本症例のように 6 cm 以上の嚢胞は 2 ~ 13%^{15, 16, 18, 19)} と報告されている。発生部位は、従来から Bergmann ら¹⁾ や萩崎²⁰⁾ の分類が汎用されている。嚢胞が顎舌骨筋上に位置するものを舌下型、顎舌骨筋下にあるものをオトガイ下型、舌下から顎舌骨筋を越えてオトガイに至る舌 - オトガイ下型とし

ている。口底およびオトガイ下に発生した類表皮嚢胞で、大野ら¹⁵⁾ は 11 例中 2 例、小林ら¹⁶⁾ は 16 例中 1 例が舌下 - オトガイ下型であったと報告している。本症例は嚢胞の一部が顎舌骨筋上に伸展しており舌下 - オトガイ下型と診断した。治療は摘出が原則であり、切開や穿刺などでは再発すると報告されている¹⁵⁾。一般に、類表皮嚢胞や類表皮嚢胞の予後は良好とされているが、まれに癌性変化をきたすという報告もある^{21, 22)}。

摘出手術は口内法、口外法および両者の併用があり、一般に発生部位によって使い分けられている。近年、オトガイ下型についても口内法の摘出を推奨する報告²³⁾ がみられる一方で、口底部の脈管神経損傷が危惧されることから口外法が望ましいとの見解¹²⁾ もある。さらに、巨大な嚢胞では内容物の吸引減量を行ってから摘出したという報告もある²⁴⁾。本症例は舌下 - オトガイ下型であり、口外法で摘出した。現在まで、術後合併症の発現や再発の徴候もなく経過良好である。

結 語

今回われわれは、55 歳、男性に発生した巨大な舌下 - オトガイ下型類表皮嚢胞を経験し、若干の文献的考察を加えてその概要を報告した。

本論文の要旨は、2012 年 11 月、第 31 回財団法人博慈会合同医学集団会において発表した。

利益相反

本研究に関し開示すべき利益相反はない。

文 献

- 1) Bergmann E, Krause F, Krönlein RU, *et al.* Zystische Geschwülste des Mundes. In *Bruns P, Garre C, Küttner H, eds. Handbuch der praktischen chirurgie.* 4th Ed. Stuttgart: Enke; 1913. pp969-979.
- 2) Ettinger RL, Manderson RD. Implantation keratinizing epidermoid cysts. A review and case history. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1973; **36**:225-230.
- 3) New GB, Erich JB. Dermoid cysts of the head and neck. *Surg Gynecol Obstet.* 1937;**65**:48-55.
- 4) 西嶋克巳, 石田利広, 長畠駿一郎, ほか. 嚥下障害を伴った巨大な口底類表皮嚢胞の1例. *日口腔外会誌.* 1976;**22**:217-220.
- 5) 伊田正道, 中島嘉助, 新谷史子. 巨大な口底部類表皮嚢胞の1症例. *日口腔外会誌.* 1989;**35**:905-908.
- 6) 近藤律男, 榎本浩幸, 佃 守. 口腔底に発生した巨大類皮嚢胞の1症例. *耳鼻展望.* 2005;**48**:86-90.
- 7) 岸本 卓, 可知久志, 後藤 学, ほか. 呼吸困難をきたした口底類表皮嚢胞の1例. *日口腔外会誌.* 1982;**28**:924-927.
- 8) 樋田謙二郎, 上原亀次, 松川僑隆, ほか. 呼吸障害を伴った口底部類表皮嚢胞の1例. *日口腔外会誌.* 1983;**29**:957-962.
- 9) 石川敏夫, 戸島 均, 柴崎 修. 大きな口腔底類皮嚢胞の2例. *耳鼻臨床.* 2001;**94**:343-348.
- 10) 安樂純子, 飯田明彦, 大西 眞, ほか. 構音障害と睡眠時無呼吸を合併した巨大な舌下型類表皮嚢胞の1例. *日口腔外会誌.* 2014;**60**:587-591.
- 11) 犬塚恵美子, 加藤久幸, 岡田達佳, ほか. 舌下型類皮嚢胞の1例. *頭頸部外.* 2011;**21**:235-239.
- 12) 今井隆生, 竹本 隆, 安井昭夫, ほか. 舌下およびオトガイ下に腫脹をきたした舌下型類皮嚢胞—核磁気共鳴映像の有用性について—. *日口腔外会誌.* 1989;**35**:1917-1921.
- 13) 杉本勝一, 島原政司, 寺井陽彦, ほか. 口底部類皮嚢胞のMRI所見. *日口腔外会誌.* 1994;**40**:458-460.
- 14) Meyer I. Dermoid cysts (dermoids) of the floor of the mouth. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1955;**8**:1149-1164.
- 15) 大野邦博, 増田忠雄, 石田 恵, ほか. 口腔領域の類皮嚢胞50例の臨床統計ならびに本邦における文献的考察. *日口腔外会誌.* 1979;**25**:842-847.
- 16) 小林 裕, 木野孔司, 間仁田浩一, ほか. 口腔顎顔面領域の類皮嚢胞及び類表皮嚢胞の臨床的観察. *日口腔科会誌.* 1998;**47**:101-107.
- 17) 吉成美予, 吉田幸子, 長山 勝, ほか. 類皮・類表皮嚢胞15例の臨床的観察. *日口腔外会誌.* 1986;**32**:47-53.
- 18) 有村健二, 向井 洋, 石神哲郎, ほか. 過去25年間の類皮嚢胞および類表皮嚢胞の臨床統計的観察. *日口腔外会誌.* 1992;**38**:1441-1442.
- 19) 原田博史, 栗丸美由紀, 橋村静治, ほか. 口腔領域における類表皮嚢胞および類皮嚢胞の臨床病理学的検討. *日口腔外会誌.* 1995;**41**:878-880.
- 20) 萩崎為行. 巨大なる口腔底皮様嚢腫の一例. *耳鼻咽喉.* 1929;**2**:562-569.
- 21) Devine JC, Jones DC. Carcinomatous transformation of a sublingual dermoid cyst. A case report. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2000;**29**:126-127.
- 22) Nalini G, Nandita K, Satyawati M, *et al.* Squamous cell carcinoma in a mucosal epidermal inclusion cyst. *J Otolaryngol.* 2004;**33**:271-272.
- 23) 宮丸 悟, 緒方憲久, 竹村孝史, ほか. 口腔底類皮嚢胞の2症例. *耳鼻・頭頸外科.* 2004;**76**:887-892.
- 24) 金川英寿, 堀池 修, 橋本 誠, ほか. 巨大な口腔底類皮嚢胞例. *耳鼻臨床.* 2009;**102**:451-456.

A CASE OF A LARGE SUBLINGUAL AND SUBMENTAL EPIDERMOID CYST WITH SLEEP APNEA

Michiko ITO^{1, 2)}, Masayasu IWASE^{1, 2, 3)}, Hanon KATAYAMA^{1, 4)},
Hiroaki NISHIJIMA⁵⁾, Gen KONDO^{3, 5)} and Yohko KOHNO⁶⁾

¹⁾Department of Dentistry and Oral Surgery, Hakujikai Memorial General Hospital

²⁾Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Tsurumi University School of Dental Medicine

³⁾Division of Oral Surgery, Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Showa University School of Dentistry

⁴⁾Division of Community Based Comprehensive Dentistry, Department of Special Needs Dentistry,
Showa University School of Dentistry

⁵⁾Department of Dentistry and Oral Surgery, Jinkokai Hospital

⁶⁾Division of Pathology, Department of Oral Diagnostic Science, Showa University School of Dentistry

Abstract — We present a case of a large epidermoid cyst arising in the sublingual and submental regions. A 55-year-old man was referred to our hospital because of swelling in the submental area. On initial examination, painless, elastic, soft swelling was observed in the submental region without any functional disorder. MRI revealed a low T1-weighted and high T2-weighted well-defined cystic lesion measuring $50 \times 30 \times 50$ mm, and suggested extension of the cystic lesion in the sublingual space through the mylohyoid muscle. Furthermore, the tongue was pushed toward the back, and the airway had become constricted. Because the apnea-hypopnea index (AHI) score was 22.6 on polysomnography, moderate sleep apnea was diagnosed. We performed cyst extirpation by employing an extraoral approach under general anesthesia. Histologically, the cyst wall was lined with a keratinized stratified squamous epithelium, but it did not contain skin inclusions. Based on the histological findings, a diagnosis of epidermoid cyst was made. The postoperative AHI score (9.3) revealed remarkable improvement.

Key words: epidermoid cyst, sleep apnea, MRI

〔受付：12月6日，2014，受理：2月2日，2015〕